

症例

急速に増大した舌下部神経鞘腫の1例

武市 充生¹⁾ 岩崎 英隆¹⁾ 秋月 裕則¹⁾
 山下 理子²⁾ 藤井 義幸³⁾

- 1) 徳島赤十字病院 耳鼻咽喉科
 2) 徳島赤十字病院 検査部
 3) 徳島赤十字病院 病理部

要 旨

症例は72歳，女性．2週間前からの口腔のしみる感じ，歯磨き時の出血を主訴に近医耳鼻科を受診し，左舌下部腫瘍を指摘され精査のため当科を紹介受診した．

左舌下部に表面が白色潰瘍状の腫瘍を触知した．造影MRIでは約4 cm大で全体に造影効果を伴う左舌下部腫瘍像を呈した．経過中に急速に増大し，外来での2回の生検では診断がつかず，確定診断に難渋した．open biopsyで神経鞘腫と診断後，全身麻酔下で経口的に全摘出した．欠損部は一期縫合困難であり，吸収性ポリグリコール酸フェルト（ネオパール®）をフィブリン糊で接着させ，良好な疼痛コントロールと上皮化を得ることができたので報告する．

キーワード：舌腫瘍，神経鞘腫，縫合補強材，吸収性ポリグリコール酸フェルト，ネオパール

はじめに

舌・口腔領域に発生する神経鞘腫は，全体の1～4%とされている¹⁾．また，舌の良性腫瘍の中で，神経鞘腫は2%程度との報告がある．由来神経は三叉・舌咽・迷走・舌下・鼓索神経が考えられるが，同定された報告はなく，術後の機能障害の報告もない¹⁾．腫瘍の発育は通常は緩徐であり，急速に増大する例はまれである．今回われわれは，舌下部に発生し経過中に急速に増大し，診断に難渋した神経鞘腫1例を経験した．摘出術後の創部をネオパール®で被覆した．ネオパール®は吸収性ポリグリコール酸フェルト（文献²⁾として製品情報を記載）で脆弱な組織の縫合部や広範囲な組織欠損部位の治療に用いられているが，これを用いることで良好な疼痛コントロールと上皮化を得ることができたので報告する．

症 例

症 例：72歳 女性

主 訴：口腔のしみる感じ，出血

既往歴：高血圧，両顎下腺摘出術（右：68歳時 他院，

左：69歳時 当科）

現病歴：2010年3月から当院血液科でMALTリンパ腫の加療をされていた．同時期に左舌下部に径約3 cmの粘膜下腫瘍を認め当科でも経過をみていたが，MALTリンパ腫の加療（リツキサン®, フルダラ®の投与）では縮小せず残存していた．その後，2010年3月12日を最後に自己判断で通院が途切れていた．2011年4月から口腔のしみる感じ，歯磨きでの出血の症状があり近医耳鼻科を受診した．左舌下部腫瘍を認め，精査のため当科を紹介受診した．

現 症：左舌下部に軽度の出血を伴う白苔病変を認めた（図1）．触診で白苔部分と周囲の粘膜下に腫瘍を



図1 左舌下部に白色の腫瘍を認めた．出血も伴っていた．

触れた。頸部リンパ節は触知せず。

検査所見：白血球 $5,080/\mu\ell$ ，CRP $0.19\text{mg/d}\ell$ ，LDH $204\text{U}/\ell$ ，SCC 1.6ng/ml ，可溶性 IL2R 484U/ml その他血清生化学的異常所見なし。

画像所見：MRI で左舌下部に最大径約 4 cm の腫瘤を認めた（図 2）。T 1 強調画像で低信号，T 2 強調画像で高信号であり，信号は一部が不均一だが，Gd-DTPA での造影では腫瘤全体に造影効果が見られた。

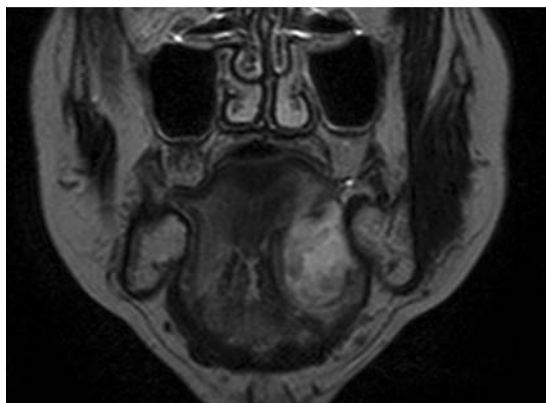


図 2 MRI T 2 強調画像

臨床経過：外来での白苔部分からの初回生検では判定不能という結果であった。1 週間後に再生検したが，炎症性肉芽組織と細菌塊で腫瘍性病変なし，という結果で確定診断に至らなかった。その後の通院中に腫瘍は急速な増大傾向を示し（図 3），同部位の疼痛による摂食障害も出現した。外来生検での表在組織採取では診断確定困難と判断し，手術室での open biopsy による深部組織採取を提示した。軽度の認知症症状を有するため，家人との十分な informed consent の後に

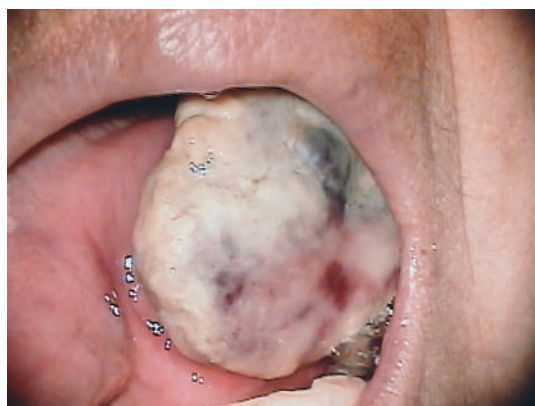


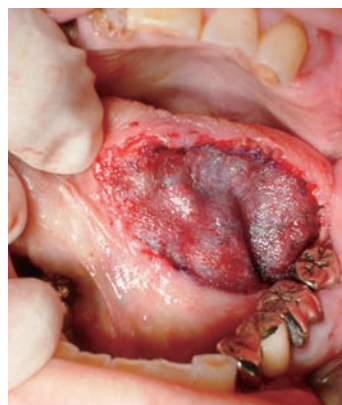
図 3 腫瘍は急速な増大傾向を示した。

open biopsy を行った。局所麻酔下で隆起部と粘膜下腫瘍部の組織を採取し，凍結標本で腫瘍細胞の存在を確認した上で追加で十分な検体を採取した。病理結果は神経鞘腫であった。腫瘍は 4 cm 大と大きい，両側顎下腺摘出後であること，十分な開口ができることから外切開ではなく，経口的に摘出する方法を選択した。舌や舌根浮腫による気道狭窄の合併症が起こった場合は，同時に気管切開術を行う予定とした。摘出による欠損が大きく一期縫合困難な場合の対処として，遊離皮弁による充填か被覆材による処置とするかについて相談し，遊離皮弁による手術は希望されなかったためフィブリン糊の使用について informed consent をとり，ネオベール®を使用することとした。以上に加え，神経脱落症状出現の可能性について説明の上で手術を行った。

手術所見：経鼻挿管による全身麻酔で，万能開口器により視野を確保した（図 4）。安全域をつけて粘膜切開し舌筋組織を剥離して腫瘍被膜を確認し，被膜に



摘出前



摘出後（ネオベール®貼付）

図 4 術中所見

沿って背側に剥離を進めた。神経・脈管は視野に現れず、由来神経を同定することはできなかった。摘出後の欠損部は大きく、やはり一期的に縫合するのは困難と考えられた。欠損部の表面の面積に合わせてネオパール®をカットし、欠損部にあててフィブリン糊スプレーで固定した(図4)。舌および舌根浮腫所見はなく、気管切開術は行わずに手術を終了した。摘出物は4.5×3.5cmの大きさで断面は充実性で、腫瘍実質は白色と淡黄色であった(図5)。

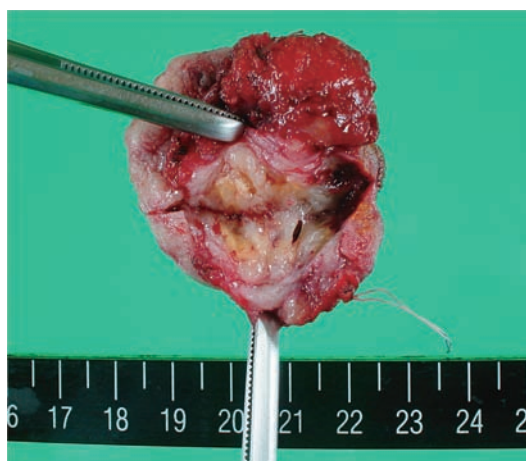


図5 摘出標本

術後の経過：創部腫脹や出血もなく、舌運動障害、味覚障害、舌感覚障害等の神経脱落症状は出現しなかった。術後1日目から流動食の経口摂取を開始したが創部痛はほとんどなく、鎮痛剤を服用することなく摂取可能であった。病理組織検査では、腫瘍部分に Antoni A 型と Antoni B 型が混在する神経鞘腫という結果であった(図6)。術後3日目に退院し、術後7日目、14日目に外来受診したが、ネオパール®は脱落することなく創面を被覆しており、出血もなかった。その後ネオパール®は術後約20日目に自然に脱落したが、創面は良好に治癒していき術後57日目には粘膜上皮は正常な状態となった(図7)。

考 察

神経鞘腫は Schwann 細胞から発生する神経原性腫瘍で、被膜を有する良性腫瘍である。舌・口腔領域に発生する神経鞘腫は、全体の1～4%とされており、好発年齢は平均20歳台と比較的若年者での報告が多

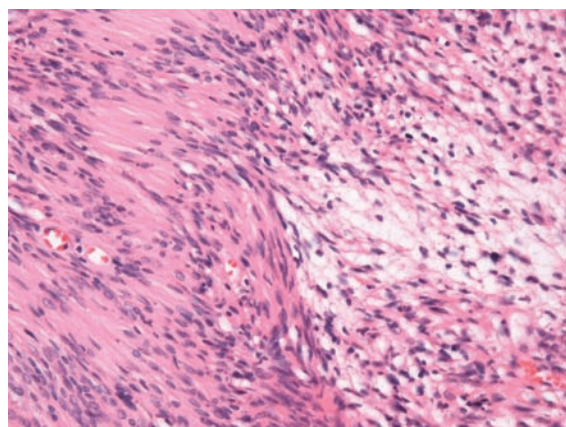


図6 病理所見(HE染色) 細胞が密で核の柵状配列がみられる Antoni A 型(左側)と、細胞が粗な Antoni B 型(右側)が混在している。

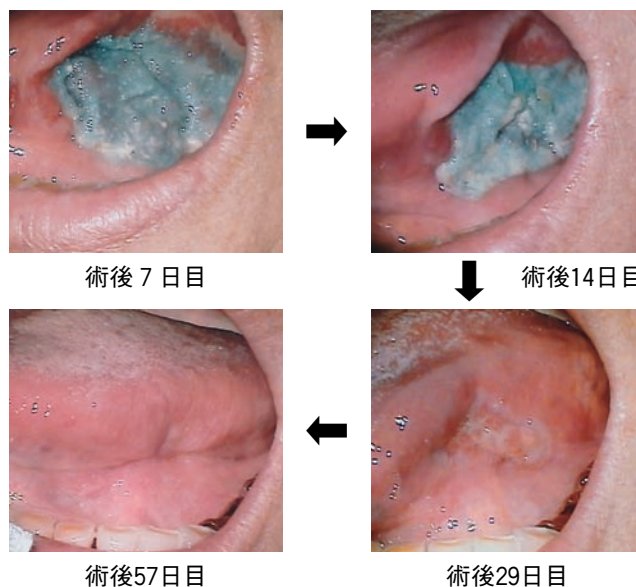


図7 術後の経過

い。発生部位は舌背・舌尖・舌縁・舌根・舌下で、ほぼ均等な割合で発生すると報告されている。

由来神経は三叉・舌咽・迷走・舌下・鼓索神経が考えられるが、同定された例や、術後の機能障害の報告例はない¹⁾。本症例でも神経脱落症状は出現せず、由来神経も不明であった。

神経鞘腫の発育は通常は緩徐であり、本症例のように急に増大する例は極めてまれである。悪性転化例ではこのように急速増大する場合があります、鑑別が重要となる³⁾。悪性転化例では無痛性の急速増大となる報告例があるが、本症例では痛みを伴っていた。本症例では、腫瘍が左舌下部粘膜を破って口腔内に露出し、細

菌等の病原体が腫瘍に接触して感染を起こし感染性組織が急に増生したことが増大の機序ではないかと考えられた。病理組織像では隆起部の腫瘍の大部分を壊死物質や菌塊が占めていた。神経鞘腫が表面に露出して、感染を起こして急に増大した本症例は非常に珍しい例と思われた。

本症例では外来での生検2回で診断がつかず、通常の神経鞘腫とは異なる急速増大する経過をとったこともあり診断に難渋した。神経鞘腫の病理診断には十分な検体が必要なことに加え、感染肉芽や壊死組織により更に検体採取が難しくなったことが一因と考えられた。治療と診断を兼ねて摘出術を行う選択肢も考えられたが、良悪の別により術式が大きく異なるため、open biopsyによる診断確定を優先した。神経鞘腫と診断がついたことで経口法による摘出術を選択でき、低侵襲で手術を遂行できた。

腫瘍摘出部の欠損に対し、従来は可能であれば一期縫合を行い、できない場合には皮弁による充填や被覆材をタイオーバー法で縫合固定する方法がとられてきた。移植には薄い皮弁が望ましく、前腕皮弁、前外側大腿皮弁、腹直筋皮弁などが考えられるが、皮弁作製のための手術侵襲や、皮弁による舌運動への影響や誤嚥が問題となる⁴⁾。本症例は72歳で軽度の認知症症状も出ており、誤嚥のリスクも考えられたことから皮弁手術は希望されなかった。次に、テルダーミス^{®5)}などの従来の被覆材については創部への完全な密着が難しいこと、また材質が硬めで可動性が悪いためにやはり舌運動に支障が出ることが問題であった。そこで本症例では、ネオベール[®]のフィブリン糊固定による被覆を選択した。

ネオベール[®]は肺・気管支・肝・消化管等の脆弱な組織の縫合部や広範囲な組織欠損部位の治療に用いられているが、最近では口腔や鼻腔の粘膜欠損部分の治療に用いられ、良好な出血防止、疼痛コントロール、上皮化にて治癒した例が報告されている^{6), 7)}。本症例でも、食事摂取や会話での舌運動によってもネオベール[®]は脱落することなく被覆状態が保たれ、かつ出血することなく術後の疼痛も非常に軽微で経過した。ネオベール[®]は使用後約15週で吸収されることから、異物として長期に残存する心配はないとされている。口腔領域で用いる際には気道異物となる可能性が否定できないが、今回は術後約20日目に自然脱落し支障を来さ

なかった。術後57日目の再来時には良好な上皮化がみられており(図5)、瘢痕拘縮も来することなく、舌運動機能も問題なく経過している。今後、口腔咽頭粘膜の欠損を生じる手術では、有効な選択肢になり得ると考えられた。

結 語

左舌下部に発生した神経鞘腫の一例を経験した。急速に増大し、外来生検で診断がつかなかったため確定診断に難渋した。確定診断後に経口的に全摘術を行い、神経脱落症状を来さず、拘縮を起こすことなく治癒することができた。欠損部分はネオベール[®]をフィブリン糊で固定して被覆し、良好な疼痛コントロールを得、粘膜も良好に治癒した。

本論文に関連して、開示すべきCOIはありません。

文 献

- 1) 伴 有紀：神経鞘腫 舌・口腔の神経鞘腫. *JOHNS* 20:609-613, 2004
- 2) GUNZE Medical Division ネオベール(NEOVEIL)製品情報
入手先：http://www.gunze.co.jp/e/medical/product/product_catalog.html#neoveil
- 3) 岡村卓穂, 熊木伸枝, 安田政実, 他：Schwannomaから悪性転化をきたしたと考えられた右頸部迷走神経由来 malignant peripheral nerve sheath tumor (MPNST)の1例. *診断病理* 20:110-113, 2003
- 4) 木股敬裕, 難波祐三郎, 杉山成史：口腔・中咽頭の再建. *ENTONI* 67:62-67, 2006
- 5) 石田寛友, 熊谷憲夫, 田辺博子, 他：皮膚欠損用グラフト(SS-D)を用いた臨床使用例の検討. *基礎と臨床* 26:1574-1584, 1992
- 6) 荒木康智, 佐藤靖夫, 國弘幸伸, 他：鼻科手術におけるPGAシート(ネオベールシート)の使用経験. *耳鼻臨床 補冊*131:154, 2011
- 7) Sato Y, Watanabe S, Murakami K et al: Clinical experience using a combination of PGA sheet and spraying of fibrin glue to cover partial resection of tongue carcinoma. *Hosp Dent Oral-Maxillofac Surg* 22:203-206, 2010

Rapidly growing sublingual schwannoma : A case report

Atsuo TAKEICHI¹⁾, Hidetaka IWASAKI¹⁾, Hironori AKIZUKI¹⁾,
Michiko YAMASHITA²⁾, Yoshiyuki FUJII³⁾

1) Division of Otorhinolaryngology, Tokushima Red Cross Hospital

2) Division of Clinical Laboratory, Tokushima Red Cross Hospital

3) Division of Pathology, Tokushima Red Cross Hospital

We report the case of a 72-year-old woman who visited our hospital because of a sublingual tumor with bleeding. The tumor was suspected to be malignant because it grew rapidly. In fact, the reason was that it was exposed to the oral floor and became infected. The tumor was removed under general anesthesia. For postoperative treatment, we covered the mucosal defect with an absorbable polyglycolic acid sheet (Neoveil®) using fibrin glue spray instead of ordinary methods such as the skin flap method and suture. Neoveil® exerted a favorable hemostatic effect, pain control, and mucosal healing. A histological examination showed that the tumor cells were arranged in a palisading pattern of Antoni type A cells and Antoni type B cells.

Key words: tumor of the tongue, Schwannoma, absorbable reinforcement material, Neoveil

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 17:75–79, 2012
